

. 经验介绍 .

儿童低级别脑动静脉畸形的治疗

吴 亮 黄 玮 余永佳 利文倩 陆 健 林正锋

【摘要】目的 探讨儿童低级别(Spetzler-Martin 分级 I~Ⅲ级)脑动静脉畸形(AVM)的治疗方法。**方法** 2005 年 7 月至 2013 年 6 月采取单一或综合模式治疗儿童低级别 AVM 42 例,其中手术治疗 27 例(单一手术治疗 24 例,栓塞联合手术治疗 3 例),单一栓塞治疗 4 例,单一 γ 刀治疗 8 例,栓塞联合 γ 刀治疗 3 例。**结果** 除 2 例手术后死亡外,其余 40 例随访 12~52 个月,平均 25.2 个月。25 例手术中,除 2 例复发外,23 例 AVM 完全消除;4 例单一栓塞治疗后 3 例 AVM 完全消除;8 例单一 γ 刀治疗后 AVM 完全消除。**结论** 儿童低级别 AVM 采取单一或综合模式治疗可有效消除病变,效果确切。

【关键词】 脑动静脉畸形;低级别;儿童;治疗;疗效

【文章编号】 1009-153X(2016)05-0294-03 **【文献标志码】** B **【中国图书资料分类号】** R 743.4; R 651.1⁺

儿童脑动静脉畸形(arteriovenous malformation, AVM)少见,仅占有脑 AVM 的 3%~20%^[1]。2005 年 7 月至 2013 年 6 月共收治 14 岁以下的儿童脑 AVM 共 76 例,占同期收治的 435 例 AVM 的 17.5%,其中低级别脑 AVM(Spetzler-Martin 分级 I~Ⅲ级)为 42 例。我们对此部分病例采取单一或综合模式治疗,取得良好效果,现报道如下。

1 资料与方法

1.1 一般资料 42 例中,男 23 例,女 19 例;年龄 3.5~14 岁,平均 10.1 岁。31 例出血病例入院时意识清醒 10 例,嗜睡 7 例,昏睡 6 例,浅-中度昏迷 8 例,突发头痛呕吐 9 例,癫痫大发作 2 例,局限性运动发作 2 例,肢体偏瘫 7 例,运动性失语 3 例,感觉性失语 2 例,偏盲 2 例,单侧感觉异常 2 例,共济失调 2 例。11 例非出血病例表现为局限运动发作 3 例,精神运动发作 2 例,反复头晕头痛 2 例,复视 1 例,智力发育障碍 1 例,精神症状 1 例,头部外伤后影像学检查发现 1 例。**1.2 影像学表现** 均行头颅 CT 检查。27 例为脑实质内出血(6 例破入脑室系统),4 例单纯脑室内出血。脑实质内出血包括额叶 4 例,颞叶 3 例,顶叶 8 例,基底节区 2 例,丘脑 1 例,枕叶 3 例,胼胝体 3 例,小脑 2 例,脑干 1 例。血肿量: <5 ml 2 例,5~30 ml 15 例, >30 ml 10 例。所有患儿均行脑血管影像检查证实为 AVM,其中 DSA 检查 28 例,MRA 检查 8 例,CTA 检查

6 例。按 Spetzler-Martin 分级:Ⅰ级 12 例,Ⅱ级 14 例,Ⅲ级 16 例。

1.3 治疗方法 本组 42 例完成单一或综合模式治疗。手术治疗 27 例,均在入院后 48 h 内完成手术治疗,其中 22 例浅表或深部非功能区 AVM 伴或无血肿的患儿,单纯行显微手术;2 例深部 AVM 出血并脑疝的患儿,急诊术中仅能行去骨瓣外减压;3 例畸形血管团较大的栓塞后再行手术治疗。单一 NBCA 胶或 Onyx 胶栓塞治疗 4 例,为浅表非功能区、单一血管供血的 AVM。单一 γ 刀治疗 8 例,栓塞联合 γ 刀治疗 3 例,均为浅表或深部功能区的 AVM。

2 结果

除 2 例急诊术后死亡外,其余 40 例随访 12~52 个月,平均 25.2 个月。25 例手术后 2 周行血管造影检查,显示手术全切 AVM;24 例术后未出现新的神经功能缺损,1 例术后原有神经功能缺损加重,但无严重后遗症。术后随访发现 2 例 AVM 复发,再次手术治疗;23 例手术达到 AVM 完全消除,消除率为 92.0%(23/25)。4 例栓塞治疗中,3 例 AVM 完全消除,消除率为 75.0%(3/4);1 例部分消除的患儿行手术治疗。11 例 γ 刀治疗或栓塞联合 γ 刀治疗中,9 例达到 AVM 完全消除,消除率为 81.8%(9/11);2 例大部分消除有待进一步治疗。

3 讨论

儿童脑 AVM 最常见的症状为脑出血。儿童脑 AVM 出血的年风险率(2%~4%)高于成人(1%~3%)^[1],而且有逐年递增发生出血的风险。有学者报道儿童低级别 AVM 的出血率为 85%^[2]。本组病例出血率

doi:10.13798/j.issn.1009-153X.2016.05.012

作者单位:535000 广西,钦州市第二人民医院神经外科(吴 亮、利文倩、陆 健、林正锋);530021 南宁,广西医科大学第一附属医院神经外科(黄 玮、余永佳)

为 73.8%(31/42),接近上述文献报道。Schaller 等^[3]认为低级别 AVM 中,小型 AVM(直径<3 cm)有更高的出血倾向。本组小型 AVM 的出血率达 61.9%(26/42),考虑到儿童有较长的预期寿命,采取积极有效的治疗方法消除 AVM 的出血隐患非常重要。

目前,手术是脑 AVM 的主要治疗手段。对于低级别 AVM,儿童手术和成人一样可获得高治愈率、低致残率和低病死率^[1-3]。Schaller 等^[3]报道包括儿童和成人 Spetzler-Martin 分级 I~Ⅲ级的 62 例 AVM 手术病例,消除率达 98.4%,致残率仅 3.2%,无死亡病例。本组手术治疗消除率达 92.0%,致残率为 4.8%,与上述报道相近。对于儿童病例,我们优先选择显微手术主要基于以下几点考虑:①浅表和深部非功能区的 AVM,显微手术可有效消除出血隐患,对神经功能的影响较小;②术中可应用神经导航、立体定向、术中 B 超等方法增加判断的准确性;③出血病例手术时可利用血肿腔的自然腔隙分离 AVM 病灶,减少周围组织的损伤;④典型 AVM 出血只是拆散半卵圆中心的纤维束,而不会彻底损伤纤维束^[4],清除血肿有利于神经功能恢复。Sanchez 等^[5]认为儿童神经系统的可塑性好,所以在手术耐受、神经康复等方面,预后较成人好。我们考虑上述观点亦是支持本组手术治疗效果较为满意的原因。手术治疗的时机,现在仍有争议。Fullerton 等^[6]认为儿童 AVM 早期手术能得到更好的临床效果。但有学者认为儿童 AVM 的畸形切除手术过程复杂而漫长,条件允许应尽量择期手术^[4]。本组病例均早期手术并获得良好效果。我们的建议是如果患儿颅内出血尚未构成致命威胁,考虑到儿童有较成人更高的再出血率和不良预后,有必要尽早手术消除出血隐患。

目前,血管内栓塞治疗主要是作为手术和γ刀的辅助治疗,闭塞关键的供血动脉,减少血流和缩小 AVM 病灶。而对于浅表、血管团小、供血动脉单一的 I~Ⅱ级病例,栓塞治疗可望获得完全治愈。Weber 等^[7]报道 47 例使用 Onyx 术前栓塞,可使 AVM 闭塞 84%。我们的体会是栓塞后手术出血少,畸形血管团缩小固化,切除较为容易。Katsaridis 等^[8]使用 Onyx 治疗 101 例 AVM,28 例(27.7%)获得完全消除,17 例(17.8%)接近完全消除。本组 4 例 I~Ⅱ级病例行栓塞治疗,消除率为 75%(3/4),效果较为满意,但我们的病例数较少,且仅为选择性的低级别病例,不能与上述报道比较。婴幼儿血管细小,实行血管内治疗,选择能进行治疗的血管非常困难甚至是不可能^[9],一定程度上限制了血管内治疗在儿童

AVM 中的应用。

γ刀对于 AVM 的治疗价值越来越受到重视,大量文献报道γ刀可作为脑 AVM 的单一治疗或构成综合治疗模式。Pan 等^[10]报道γ刀治疗 105 例 AVM,2 年脑 AVM 消除率为 65%,总消除率为 81%,其中小型(<3 cm)脑 AVM 治愈率达 91%、中型(3~6 cm)达 86%。Back 等^[11]报道栓塞后γ刀治疗 AVM 15 例,治愈率达 60%(9/15)。本组单一γ刀治疗治愈率为 87.5%(7/8),栓塞后γ刀治疗治愈率 67%(2/3),与上述报道相近。但γ刀治疗具有延迟效应的特点,畸形血管团一般在 2~3 年内逐渐闭塞,“治疗窗”有再次出血的风险,而且放疗对儿童神经系统的发育有潜在的不可预知的副作用。我们的体会是,对于手术难度大的高风险低级别脑 AVM,γ刀消除 AVM 效率稍差,但能避免手术的高风险。

儿童 AVM 完全治愈后仍有复发可能。我们随访发现 2 例手术后复发。对于术后复发的原因仍有不同见解。Hoh 等^[12]认为儿童血管内皮生长因子的高分泌状态对于 AVM 的形成有关联,且在新生血管形成时期结束前切除 AVM 可能导致另一个 AVM 的生成。Darsaut 等^[13]认为其原因包括细小的引流静脉被毗邻血肿压迫、术后水肿或者细小供血动脉的痉挛,此种现象被认为在儿童病例中更常见,因此建议术后 3~6 个月检查证实治愈的 5 年后再次造影。我们认为无论选择何种治疗,长期的影像学随访对于消除儿童 AVM 的复发再出血隐患十分必要。

总之,对于儿童低级别脑 AVM 的治疗选择,无论采取单一或综合模式治疗,都应兼顾能够有效降低治疗风险并达到理想的治疗效果。我们的经验是浅表或深部非功能区的 AVM,手术应作为首选;对于预知手术高风险的功能区 AVM 病例,γ刀治疗可作为替代;栓塞治疗主要用于手术和γ刀治疗的辅助,而对于浅表非功能区、血管团体积小、供血动脉单一的选择性病例,栓塞治疗可望获得完全治愈。

【参考文献】

[1] Smith ER, Butler WE, Ogilvy CS. Surgical approaches to vascular anomalies of the child's brain [J]. Curr Opin Neurol, 2002, 15(2): 165-171.

[2] Kiris T, Sencer A, Sahinbas E, et al. Surgical results in pediatric spetzler-martin grades I~Ⅲ intracranial arterio-venous malformations [J]. Childs Nerv Syst, 2005, 21(1): 69-74.

- [3] Schaller CSJ. Microsurgical results for small arteriovenous malformations accessible for radiosurgical or embolization treatment [J]. *Neurosurgery*, 1997, 40(4): 664-672.
- [4] Winn HR, Klot M, Brem H, *et al.* 尤曼斯神经外科学[M]. 第 5 版. 王任直译. 北京: 人民卫生出版社, 2009. 2760-2769.
- [5] Sanchez-Mejia RO, Chennupati SK, Gupta N, *et al.* Superior outcome children compared with adults after microsurgical resection of brain arteriovenous malformations [J]. *J Neurosurg*, 2006, 105(2): 85-87.
- [6] Fullerton HJ, Achrol AS, Johnston SC, *et al.* Long-term hemorrhage risk in children versus adults with brain arteriovenous malformations [J]. *Stroke*, 2005, 36(10): 2099-2104.
- [7] Weber W, Kis B, Siekmann R, *et al.* Preoperative embolization of intracranial arteriovenous malformations with Onyx [J]. *Neurosurgery*, 2007, 61: 244-52.
- [8] Katsaridis V, Papagiannaki C, Aimar E. Curative embolization of cerebral arteriovenous malformations (AVMs) with Onyx in 101 patients [J]. *Neuroradiology*, 2008, 50(7): 589-597.
- [9] 廖兴胜, 肖绍文, 谭源福, 等. 儿童脑动静脉畸形综合治疗的临床分析[J]. 中国临床神经外科杂志, 2011, 16(1): 39-41.
- [10] Pan DH, Kuo YH, Guo WY. Gamma knife surgery for cerebral arteriovenous malformations in children: a 13-year experience [J]. *J Neurosurg Pediatr*, 2008, 1(4): 296-304.
- [11] Back AG, Vollmer D, Zeck O, *et al.* Retrospective analysis of unstaged and staged gamma knife surgery with and without preceding embolization for the treatment of arteriovenous malformations [J]. *J Neurosurg*, 2008, 109(Suppl): 57-64.
- [12] Hoh BL, Ogilvy CS, Butler WE, *et al.* Multimodality treatment of nongalenic arteriovenous malformations in multimodality treatment of nongalenic arteriovenous malformations in pediatric patients [J]. *Neurosurgery*, 2000, 47(2): 346-358.
- [13] Darsaut TE, Guzman R, Marcellus ML, *et al.* Management of pediatric intracranial arteriovenous malformations: experience with multimodality therapy [J]. *Neurosurgery*, 2011 69(3): 540-556.

(2014-09-25 收稿, 2014-12-17 修回)